

モヤモヤ病に合併し発生と消失を認めた前脈 絡動脈末梢部脳動脈瘤の 1 例

—症例報告と文献的考察—

国立泉北病院脳神経外科

知 禿 史 郎, 久 永 學, 奥 野 修 三

奈良県立医科大学脳神経外科

富 永 正 夫, 榊 寿 右

DEVELOPMENT AND DISAPPEARANCE OF DISTAL ANTERIOR CHOROIDAL ARTERY ANEURYSM ASSOCIATED WITH MOYAMOYA DISEASE —A CASE REPORT AND THERAPY OF DISTAL ARTERY ANEURYSM—

SHIRO CHITOKU, MANABU HISANAGA and SHUZO OKUNO

Department of Neurosurgery, Senboku National Hospital

MASAO TOMINAGA and TOSHISUKE SAKAKI

Department of Neurosurgery, Nara Medical University

Received July 24, 1991

Summary: We experienced a case which had an aneurysm associated with Moyamoya disease.

A 63-year-old male was admitted to our hospital with the diagnosis of cerebral infarction in 1987. He was readmitted with the diagnosis of intracerebral hemorrhage with ventricular rupture in July 1990. Cerebral angiogram showed that an aneurysm had developed at the distal portion of the anterior choroidal artery. The aneurysm was treated conservatively and disappeared on 43 days after onset. To prevent intracranial hemorrhage again, he underwent reconstructive surgery on both sides.

In this paper, we reviewed 34 reported cases of distal artery aneurysm associated with Moyamoya disease and Moyamoya-like disease and discuss the choices of therapy.

Index Terms

distal aneurysm, Moyamoya disease, anterior choroidal artery, therapy

I. は じ め に

モヤモヤ病・モヤモヤ類似疾患に合併する動脈瘤のうち、約 50% が末梢部に発生するといわれる²⁾。これらは、自然消失するものもあるが、手術例・剖検例では真性動脈瘤の報告もあり手術の必要性も指摘されており⁵⁾、その治療方法については議論がある。今回われわれはモ

ヤモヤ病に合併した前脈絡動脈末梢部動脈瘤の 1 例を経験したので、その詳細を報告すると共に末梢部動脈瘤の報告例 34 例を併せ、治療方針について若干の文献的考察を加え報告する。

II. 症 例

症 例：63 歳，男性

主 訴：意識障害，左片麻痺

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：昭和 62 年 8 月脳梗塞精査のため，脳血管撮影施行．右後大脳動脈の閉塞と両側内頸動脈末梢部，前大脳動脈・中大脳動脈起始部の狭窄とモヤモヤ血管が認められた (Fig. 1)．保存的に加療され，退院後近医に通院していた．

現病歴：平成 2 年 7 月 9 日意識障害・片麻痺にて発症．近医搬送後当科紹介入院となる．

入院時現症：意識レベルは Japan Coma Scal I-2 で，左同名半盲，左片麻痺を認めた (上肢 1/5，下肢 1/5)．

入院後経過：入院時の CT では，右後頭部の梗塞に加え脳室内穿破を伴う右基底核部出血を認めた (Fig. 2 upper)．脳血管撮影検査では両側頸動脈とその分枝の狭窄，モヤモヤ血管には大きな変化はなかったが，前脈絡動脈末梢に 7×5×3 mm の動脈瘤の発生を認めた (Fig. 3a)．計測上の動脈瘤は血腫中に存在し，ここから出血したものと推察した．神経学的に悪化を認めなかったことや，脳深部に存在する動脈瘤であり，直達術による脳実質の損傷，側副血行路の損傷等の問題を考慮し，保存的に加療を行った．Follow up CT では脳内血腫は消退傾向が認められた (Fig. 2 lower)．8 月 21 日の脳血管撮影検査では動脈瘤は消失していた (Fig. 3b)．動脈瘤消失確認後からリハビリテーションを開始し，全身状態の回復を待ち，再出血予防目的に右側 EDAS (encephalo-duro-arterio-synangiosis)，左側 STA-MCA anastomosis を施行．現在経過良好でリハビリに励んでいる．

III. 考 察

モヤモヤ病に合併した動脈瘤の記載は，1967 年 Pool¹⁷⁾ に始まり，これまで症例報告的に文献が散見される．本症例は脳梗塞の精査によりモヤモヤ病と診断され，その後末梢部動脈瘤の破裂により脳内出血をきたしたものと推察された．過去にも同様に，モヤモヤ病に合併した末梢部動脈瘤の発生が認められたという報告が 4 例あり^{1,2-5)}，そのうち 2 例^{1,5)}は直達術により切除され病理学的に偽性動脈瘤と診断されており，2 例^{3,4)}は動脈瘤の消失を認めている．

本症例も後天性の動脈瘤であり，自然消失を認めたこと，末梢部の動脈瘤であることなどから通常の動脈瘤とは異なり，脆弱な動脈が末梢で破綻をきたし，そこに血液が貯留した偽性の動脈瘤と思われた．しかし，実際に末梢部動脈瘤の病理学的検査結果を調べると 12 例中 5 例が真性動脈瘤と判明した (Table 1)．このうち大野ら⁹⁾



Fig. 1. Right carotid angiograms (R-CAG) from first admission.

の症例は出血を繰り返し死亡し，剖検で真性動脈瘤と診断されている．定藤ら⁹⁾も同様に病理検査が行われたモヤモヤ病に合併する末梢部動脈瘤のうち真性動脈瘤が半数存在したことを指摘している．

治療方針を考える上で真性動脈瘤の可能性があるため動脈瘤の根治術を行うのが理想的である．モヤモヤ病に合併する動脈瘤の治療方針に関して Yabumoto 等⁹⁾は直達術を行う条件として①嚢状動脈瘤であること，②硬膜からの側副血行路が少ないこと，③動脈瘤周囲に側副血管が少ないことを述べている．さらに，末梢部動脈瘤は通常の動脈瘤とは異なり脳深部に存在することがあり手術による脳実質の損傷を考慮せねばならない．

一方，過去の末梢部動脈瘤 35 例の治療と予後について調べてみると (Table 2)，保存的治療群が一番多く 22 例で，生存が 14 例あった．直達術では 10 例中 8 例が生存，血行再建術では 3 例全例に動脈瘤の消失を認めた．保存的治療群の生存 14 例はすべて予後良好で 13 例で動脈瘤の消失が確認されている．残りの 8 例は死亡例であるがこれらは入院時より意識レベルや全身状態に問題のある例が大半を占め，やむなく保存的治療を行ったという印象が強かった．

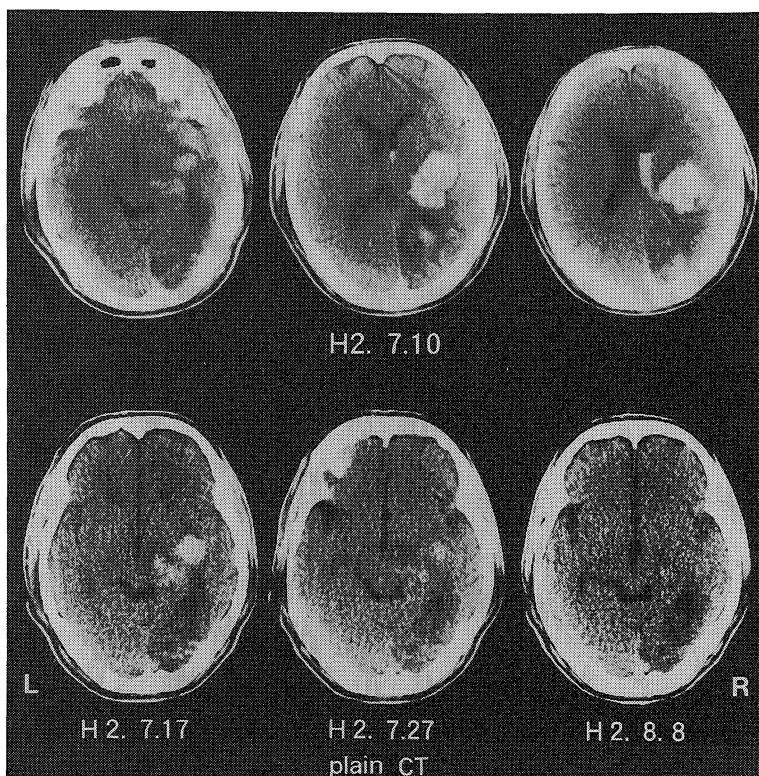


Fig. 2. Upper: CT scans on second admission. Lowe: Follow up CT scans after admission.

以上のことから、入院時、緊急に血腫除去やドレナージを必要とする症例を除き、動脈瘤に対する治療を考える場合、Yabumoto の条件や脳実質の損傷を十分検討し、直達術可能と判断されれば直達術を施行する。そして直達術困難な症例は保存的に治療をおこなう。ただしその場合患者の臨床症状とともに、動脈瘤の大きさ、性状についても正確に把握する必要がある。動脈瘤が増大傾向を示さない限り保存的に経過観察を行えばよい。保存的治療群 12 例の動脈瘤の消失までの期間は、平均 4.1 カ月であることから最低数カ月の注意深い観察が必要であろう。約 3 週を経過し、症状に変化がなければ良好な予後が期待できる。

血行再建術に関しては症例も少ないが、3 例とも動脈瘤の消失を認め予後も良好である。モヤモヤ病の出血例で血行再建術を施行した場合の評価について米川等¹⁰⁾は、血行再建術群の方が統計学的有意差はないが、保存的治療群と比較して再出血の頻度が低いことを報告している。血行再建術は、将来の虚血病変の進行を予防し、再出血の頻度を低下させる目的で施行するのが望ましいものと考えられる。再出血の特徴として、前回と異なった部位から

出血する事が多いとの報告もあり¹⁰⁾、動脈瘤の直達術例、保存的治療例に関わらず、血行再建術を施行する事が望ましいと思われた。

V. 結 語

1. 前脈絡動脈末梢部動脈瘤の発生と消失が観察されたモヤモヤ病の 63 歳男性例について報告した。
2. モヤモヤ病・モヤモヤ類似疾患に合併した末梢性動脈瘤では、病理学的に真性動脈瘤の存在が確認されており、可能ならば直達術を行うのが望ましい。ただし手術による側副血行路や、脳実質に対する損傷などを検討しなければならない。
3. 手術が困難と考えられる症例は保存的に治療を行うか、血行再建術を行う。全身状態が良好で、3 週間を経過し生存している症例は、保存的治療により良好な予後が期待される。ただし、その経過観察中は臨床症状とともに、動脈瘤の大きさ・性状についても正確に把握する必要がある。
4. 血行再建術は、進行性の虚血症状を予防し、将来の再出血率を低下させる目的で保存的治療群や直達術後

Table 1. Pathological results of distal aneurysms associated with moyamoya phenomenon

Case No.	Author	Year	Age	Sex	Side of MMP	Site of aneurysm	Size of aneurysm	Symptoms & signs	Treatment	Result	Path. diag.
1	Ohno	1976	34	M	B	L-BG	4×4×4mm	SAH	Conservative	Dead	TRUE
2	Tanaka	1978	40	M	L	L-PCA	4×6mm	SAH	Excision(11D)	Good	TRUE
3	Furuse	1982	67	M	B	R-Ach	5×5mm	ICH	Excision(0D)	Good	PSEUDO
4	Suzuki	1982	39	F	B	BG	?	ICH	Excision(?)	?	PSEUDO
5	Yuasa	1982	51	F	B	L-PCA	—	ICH	Excision(1D)	Dead	PSEUDO
6	Murakami	1984	33	M	L	Q-BG	Small	IVH	VD	Dead	TRUE
7	Sato	1984	51	F	B	L-Pch	? mm	IVH	Excision(>46D)	Good	TRUE
8		50	M	B	R-Pch	? mm	IVH	Excision(4W)	Good	PSEUDO	
9	Konishi	1985	40	M	B	L-PCA	4×6mm	IVH	Excision(?)	Good	TRUE
10	Morii	1988	57	M	R	R-Ach	3=mm(14D) 4×3.5mm(49D)	IVH	Excision(60D)	Good	PSEUDO
11		50	F	R	R-Ach	2.5×2mm(21D)	IVH	Excision(55D)	Good	PSEUDO	
12	Sadato	1989	41	F	B	L-Pch	5×4mm(15D) 6×8mm(10W)	IVH	Excision(55D)	Good	PSEUDO

Abbreviations. MMP: moyamoya phenomenon, B: bilateral, R: right, L: left, Ach: anterior choroidal artery, BG: basal ganglia, Pch: posterior choroidal artery, SAH: subarachnoid hemorrhage, IVH: intraventricular hemorrhage, ICH: intra cerebral hematoma, Interval: between onset and angiography, or onset and death, D: day, M: month, Y: year, VD: ventricular drainage, -: not described, ?: not examined, Path. Diag.: pathological diagnosis

の症例にも施行されることが望ましい。

文 献

- 1) 古瀬清次, 松本茂男, 田中泰明, 安藤誠一, 佐和弘
- 2) 郭 隆璚, 伊東正太郎, 山本信孝, 角家 暁: モヤモヤ病, 石川 進: Moyamoya 病に合併した仮性脳動脈瘤—1 治験例と文献的考察. 脳外. 10: 1005-1012, 1982.

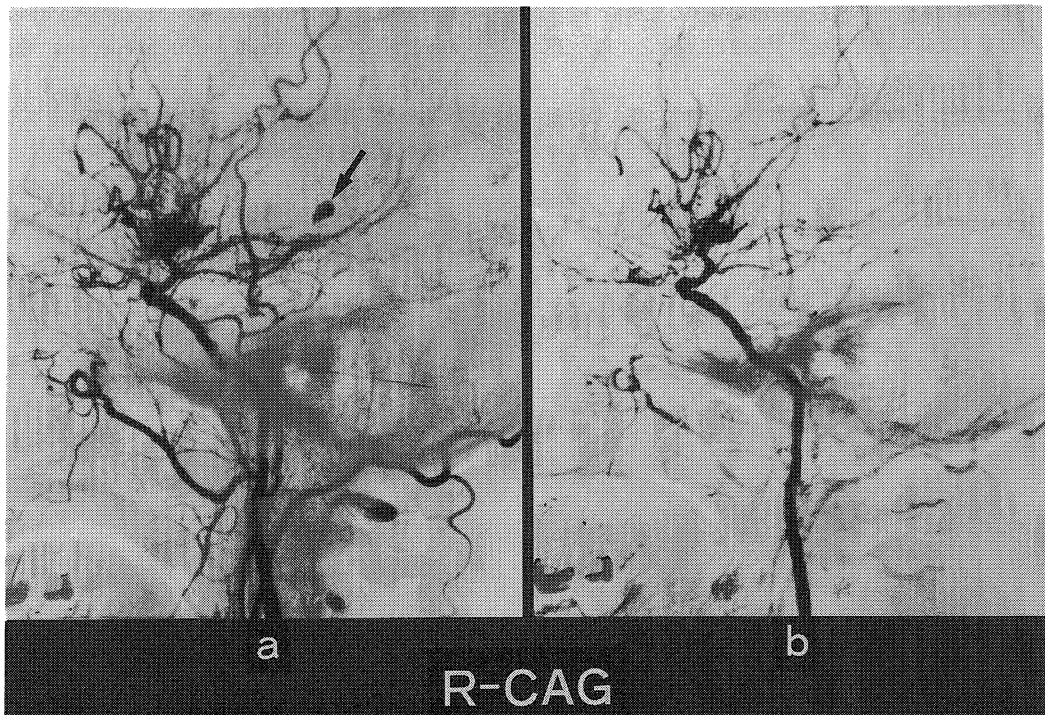


Fig. 3. Follow up angiograms from second admission.

a: R-CAG on 14 days after the onset showed an aneurysm (arrow).
 b: The aneurysmal shadow disappeared on 43 days after the onset.

Table 2. Therapy and prognosis of distal aneurysm associated with Moyamoya phenomenon

Therapy (case)	Angiographical findings of an.		Prognosis	
	Disappear	Remain	Alive	Dead
Conservative (n=22)	13	1	14	8
Direct op. (n=10)	—	—	8	2
Anastomosis (n=3)	3	0	3	0

An: aneurysm

モヤ病に合併した頭蓋内動脈瘤の意義(第1報)—通常の動脈瘤との差異:文献的考察. Neurol. Med. Chir. (Tokyo) 24: 97-103, 1984.

- 3) 児玉南海雄, 峯浦一喜, 鈴木二郎, 北岡 保, 倉島康夫, 高橋慎一郎: 脳血管 Moyamoya 病の後脈絡動脈末梢部動脈瘤について. 脳外. 4: 985-991, 1977.
- 4) Konishi, Y., Kadowaki, C., Hara, M. and Takeuchi, K.: Aneurysm associated with Moyamoya disease. Neurosurgery 16: 484-491,

1985.

- 5) 森井 研, 佐藤 進, 関口賢太郎, 渡辺正人, 山中龍也: モヤモヤ現象を伴う中大脳動脈閉塞に前脈絡動脈末梢部動脈瘤, 脈絡叢血管腫を合併し, 脳室内出血で発症した2例. 脳卒中の外科 16: 395-402, 1988.
- 6) 大野喜久郎, 藤本 司, 小松清秀, 平塚秀雄, 稲葉穰, 上笹 皓, 芝田敏勝: 動脈瘤を内在した脳底部異常血管網の剖検所見. 脳神経 28: 353-364, 1976.
- 7) Pool, J. L., Wood, E. H., 牧 豊: 米国において認

- められた脳底部に異常血管網を有する症例について.
頭蓋内に異常血管網を示す疾患(工藤達之, 編). 医学書院, 東京, p 63-68, 1967.
- 8) 定藤章代, 米川泰弘, 諸岡芳人, 今北 正: 仮性動物瘤の破裂による脳室内出血を繰り返したもやもや病の1例. 脳外. 17: 755-758, 1989.
- 9) Yabumoto, M., Funahashi, K., Fujii, T., Hayashi, S. and Komai, N.: Moyamoya disease associated with intracranial aneurysms. Surg. Neurol. 20: 20-24, 1983.
- 10) 米川泰弘, 山下耕助, 滝 和郎, 菊池晴彦: ウィリス動脈輪閉塞症の出血例の検討—特に再出血について. 厚生省特定疾患ウィリス動脈輪閉塞症調査研究班 昭和62年研究報告. p 81-84, 1987.